症例報告

子宮マニピュレーターによって生じた子宮仮性動脈瘤に対して
子宮動脈塞栓術を行い、生殖補助医療を介して生児を得た1例

メディカルパーク湘南

中川 亮、片野美菜子、中野瑛理、藤田裕彰、田中雄大

Uterine artery pseudoaneurysm caused by an uterine manipulator;
A case report

Ryo Nakagawa, Minako Katano, Eri Nakano, Hiroaki Fujita, Yudai Tanaka

Medical Park Shonan

Abstract

A uterine artery pseudoaneurysm (UAP), which usually occurs after deliveries or miscarriages, is known to cause massive vaginal bleeding and may even be fatal in some cases. We report a rare case of UAP secondary to the use of a uterine manipulator during laparoscopic surgery.

A 40-year-old woman presented with a right ovarian cyst and infertility and underwent uneventful laparoscopic ovarian cystectomy. She returned one month later with massive vaginal bleeding. Transvaginal ultrasonography revealed a cystic lesion (20 mm) with a pulsating blood flow near the uterine endometrium. We suspected UAP secondary to uterine manipulator-induced injury during the previous laparoscopic surgery, and she was referred to a tertiary center for further evaluation.

Emergency angiography revealed UAP to the left of the uterus, and the patient underwent uterine artery embolism (UAE). Following UAE, the patient conceived via assisted reproductive technology and delivered transvaginally subsequently.

A uterine manipulator is a common device used during gynecological laparoscopic surgery. We report UAP attributable to uterine manipulator-induced injury. Clinicians should be mindful that a uterine manipulator may injure the uterine endometrium with a consequent risk of UAP.

Key words: pseudoaneurysm, uterine manipulator, uterine artery embolism

緒 言

子宮仮性動脈瘤(Uterine artery pseudoaneurysm: UAP)は一般的に、分娩や流産後に生じ、大量出血をきたすことが多いが、子宮筋腫核出術など妊娠に因らない発症も報告されている。この度我々は、腹腔鏡手術中に子宮内腔に挿入した子宮マニピュレーターが原因で発生したと思われるUAPに対して、子宮動脈塞栓(Uterine artery embolism: UAE)を実施し、ARTを経て経膈分

娩に至った症例を経験したので報告する。

症 例

症例：40歳女性、1妊1産

主訴：挙児希望

家族歴：特記事項なし

既往歴：36歳 虫垂炎に対して開腹手術 右卵巢
嚢腫破裂に対して緊急開腹右付属器切除術

現病歴：前医にて卵巢嚢腫、不妊を指摘され、治
療目的に当院へ紹介受診した。初診時、経膈超音

責任著者：田中雄大（メディカルパーク湘南） E-mail: yudai_hello@yahoo.co.jp

投稿日：2021年1月24日／採択日：2021年3月28日

波断層法にて左卵巢に約70 mm大の2房性2型囊腫を認めた。MRIを撮影したところ、左卵巢内膜症性囊胞が疑われたため、Hybrid 生殖補助医療（Assisted reproductive technology: ART）の方針とした。術前の抗ミューラー管ホルモン（Anti-Mullerian hormone: AMH）は0.37 ng/ml、卵胞刺激ホルモン（Follicle stimulating hormone: FSH）は9.7 mIU/mlであった。8回の採卵を行い合計17個の卵子を獲得し、14個の受精卵から6個の凍結胚盤胞（Gardner分類 4AB、3BB、3BB、3BC、4BC、4BC）を獲得した。その後、GnRH agonist投与による偽閉経療法を行い、腹腔鏡下卵巢囊腫摘出術を実施した。術中所見として、子宮マニピュレーター（アトムメディカル株式会社製）を挿入、ポート配置はダイヤモンド型4ポートとした。癒着は軽度、腹水は少量、子宮は正常大、右付属器は切除後であった。左付属器に約70mmの卵巢囊腫を認め、これを切除した。術中経過は問題なく、左卵巢囊腫を摘出した。手術時間は52分、術中出血は少量であった。このとき、子宮マニピュレーターの挿入、抜去はスムーズであり、異常出血は認めなかった。病理結果は左卵巢内膜症性囊胞であった。

術後経過は問題なく、術後4日目に退院となった。術後13日目、術後の経過観察目的に受診したが、院内で排尿中に大量の性器出血を来した。出血直後のバイタルサインは意識清明、血圧 92/66 mmHg、脈拍 57 /分であった。腔鏡診にて外子宮口から持続的な出血を認めた。経腔超音波断層法では子宮内に長径約20 mmのecho free spaceを認め、カラードップラー法にて同部位に豊富な動脈性の血流を確認した（図1）。また、左卵巢に47 mmの血腫様所見を認めた。Hb 13.4 g/dLで

あり、貧血は認めなかった。以上の所見からUAPの疑いで高次医療機関へ緊急搬送とした。

治療経過：搬送先の高次医療機関にてdynamic CTを撮影したところ、左子宮動脈を由来とした子宮腔内の血管増生、extravasationを認めたため（図2）、UAPと診断された。同日、放射線科医師により緊急UAEを実施した。左子宮動脈からUAPへの血流を認めたため、左子宮動脈を選択的にゼラチン製剤で塞栓した（図3）。右子宮動脈からUAPへの血流は認めなかったため塞栓はせず、片側の子宮動脈塞栓で終了となった。UAE後、性器出血は速やかに収束した。UAE後1日目、Hb 8.7 g/dLと貧血は進行したが性器出血の再発はなく、UAE後2日目で退院となった。UAE後10日目、経腔超音波断層法にて子宮内のecho free spaceは長径2 mmまで縮小したため、当院へ逆紹介となった。

UAE後14日、echo free spaceは完全に消失した（図4）。UAE後3か月目からホルモン補充周

図2 術後13日目 造影CT画像 動脈相
矢印部分に、子宮腔内に約20 mmの high density area を認め、PUAと診断された。

図1 術後13日目 経腔超音波断層法、カラードップラー法
矢印部分に、子宮腔内に約20 mm のecho free space を認め、内部に動脈性の血流を認めた。

図3 UAE 左子宮動脈の選択的造影像
矢印部分に、濃染像を認める。右子宮動脈の選択的造影では
PUAへの血流は認めなかった。

図4 UAE後14日目 経膈超音波断層法
子宮腔内のecho free space は完全に消失した。

期での凍結胚盤胞移植を開始した。移植周期開始時、FSHは16.9 mIU/mlであった。当院では、月経開始後3日目からエストラジオール貼付剤1.44 mg/dayの連日投与を開始し、子宮内膜が8 mm以上、かつ血中エストラジオール値が200 pg/ml以上となったところでプロゲステロン腔坐剤 800 mg/dayの連日投与を開始し、プロゲステロン投与を開始した120時間後に原則1個の胚盤胞を移植するプロトコルとしている。本症例では2回目の凍結胚盤胞移植で妊娠成立した。妊娠経過は良好であり、癒着胎盤や前置胎盤を疑う所見も認めなかった。十分なインフォームドコンセントを行った上、妊娠40週2日でオキシトシン投与による計画分娩誘発を行い、同日経膈分娩に至った。児の所見として、出生体重2828 g、男児、Apgarスコア1分値9点、5分値10点、臍帯動脈pH 7.29、分娩時出血量1996 gであった。胎盤排出が遅延したため、用手剥離にて胎盤を娩出した。胎盤所見に異常は認めず、分娩時出血量の増加は弛

緩出血と考えられた。産褥経過は順調であり現在当院にて経過観察中であるが、UAPの再発は認めていない。

考 察

UAPとは、何らかの侵襲によって子宮の血管壁が破綻し、漏出した血液が軟性組織に覆われることで血管との交通を持つ腔を形成した状態を指す。腔の壁は脆弱で容易に破綻し、しばしば大出血の原因となる。UAPは一般的に産褥期や流産後に生じることが多く、全妊娠の0.2 %から0.3 %に生じるとの報告もある¹²⁾。妊娠に関連しない原因として、子宮筋腫核出術の報告が最も多く³⁾、稀な症例として腺筋症切除術、子宮頸部円錐切除術、腹式子宮全摘出術、腔式単純子宮全摘出術、ロボット支援子宮全摘出術が報告されている⁴⁸⁾。

Matsubaraら⁹⁾はUAPの臨床所見として、1) 帝王切開術、もしくは稀に自然分娩後 2) 産後大量出血の存在 3) 経膈超音波断層法にてlow echoic lesionの出現 4) カラードップラー法にて“yin-yang”サインまたは“to and fro”サインの出現 5) 血管造影にて濃染され、塞栓後に速やかに止血されると特徴づけている。本症例においても経膈超音波断層法にて腔内にlow echoic lesionを認め、カラードップラー法にて内部に明らかな血流を確認したことでUAPを発見することができた。さらに、dynamic CTを用いることで壁の破綻の有無、腔内の血流が左右どちらの子宮動脈由来かを推定することができた。

本症例では子宮マニピュレーター挿入以外に子宮内腔の操作を行った治療歴はなく、子宮マニピュレーターによってUAPが生じたと考えられた。当施設では子宮マニピュレーターを使用している。挿入の手順として、腔内を消毒後、付属のゾンデで子宮腔長を測定しつつ子宮内腔の方向を確認し、頸管の拡張を行ってから子宮マニピュレーター本体を挿入する。あらかじめ測定した深さまで子宮マニピュレーターを挿入し、先端のバルーンに5 ml以下の生理食塩水を注入し、子宮内腔に固定する。本症例において、子宮マニピュレーターの挿入はスムーズに行われ、術中術後に腔壁から異常性器出血は認めなかった。

子宮マニピュレーターは産婦人科領域の腹腔鏡手術において、経膈的に子宮の操作を可能にする有用な器械として広く使用されている。しかしながら、合併症として、先端による子宮穿孔、バルーンの過膨張¹⁰⁾による子宮破裂、挿入時の頸管

拡張による頸管裂傷¹¹⁾などが報告されており、少なからず侵襲的な処置と考えられる。子宮マニピュレーターに起因するUAPはこれまで1例が報告されている¹²⁾。Sekiらは、腹腔鏡下卵巣嚢腫摘出術におけるUAPを経験し、子宮マニピュレーター挿入が原因であったと報告している。デバイス先端による直接的な損傷のほか、バルーンの過膨張によって子宮内腔の圧が高まり、血管壁の破綻に繋がるのではないかと考察されている。バルーンの固定水の量に比例して子宮内圧は高まり、その適切量は子宮内腔の容量、筋層の柔軟性などによって個人差があると考えられる。固定水は一定の容量にこだわらず、子宮マニピュレーターが固定される適切な量で使用する事が重要と考えられる。

子宮マニピュレーター挿入は鈍的な操作ではあるが、侵襲的な器械であることを念頭に注意して使用しなくてはならない。また、子宮マニピュレーター挿入だけでなく、ゾンデ診や子宮内膜細胞診、組織診、頸管拡張処置など、全ての子宮内腔への操作によってUAPが生じうる可能性を考慮し、最低限かつ愛護的に行う必要がある。

本症例は、Hybrid ARTが非常に有効な症例であった。Hybrid ARTとは手術療法とARTを融合させた治療である¹³⁾。当院では、卵巣嚢腫摘出術による卵巣予備能の低下や、周期管理による採卵時期の遅延など、手術による影響で術後の採卵に苦慮することが見込まれる場合に、Hybrid ARTを提案している。その際、年齢や卵巣予備能を考慮し、3～5個の良好胚盤胞を凍結してから手術に臨むこととしている。本症例において患者は右付属器摘出後であり、AMH 0.37 ng/ml と術前からpoor responderと考えられた。嚢腫摘出術によって卵巣予備能が更に低下することが見込まれ、採卵に苦慮することが予想された。そのため、手術に先んじて採卵を行い、十分に凍結胚を得た後に手術に臨んだ。結果的に合併症としてUAPが生じ、UAEを実施した。UAEの合併症として、一時塞栓物質を用いたとしてもAMHが有意に低下する可能性がある^{14,15)}。実際に本症例でもbasal FSH が術前9.7 mIU/ml から16.9 mIU/ml に上昇しており、卵巣機能の低下が疑われた。本症例のように、手術による医原的閉経の可能性がある患者において、Hybrid ARTは良い適応であったと考える。

おわりに

今回我々は、子宮マニピュレーターによって生じた子宮仮性動脈瘤の一例を経験した。子宮マニピュレーター挿入という手技自体が、侵襲になりうることを十分に理解する必要がある。

本症例ではHybrid ARTが非常に有効な治療であった。当院ではHybrid ARTから分娩まで一元的に管理することが可能であり、状況の変化に応じて適切な治療を行うことができた。今後も施設としての特長を生かした治療を行なっていく。

本論文の発表にあたり、患者より十分なインフォームドコンセントを得た。

参考文献

- 1) Matsubara S, Kuwata T, Usui R, et al.: Uterine artery pseudoaneurysm: a master of deception. Arch Gynecol Obstet 2014; 289: 469-470.
- 2) Baba Y, Matsubara S, Kuwata T, et al.: Uterine artery pseudoaneurysm: not a rare condition occurring after non-traumatic delivery or non-traumatic abortion. Arch Gynecol Obstet 2014; 290: 435-440.
- 3) Takeda A, Kato K, Mori M, et al.: Late Massive Uterine Hemorrhage Caused by Ruptured Uterine Artery Pseudoaneurysm After Laparoscopic-Assisted Myomectomy. Journal of Minimally Invasive Gynecology 2008; 15: 212-216.
- 4) Matsubara S, Usui R, Sato T.: Adenomyomectomy, curettage, and then uterine artery pseudoaneurysm occupying the entire uterine cavity. J Obstet Gynaecol. 2013; 39: 1103-1106.
- 5) Moon G, Jeon S, Nam K et al.: Pseudoaneurysm of uterine artery causing intra-abdominal and vaginal bleeding after cervical conization. Obstet Gynecol Sci 2015; 58: 256-259.
- 6) Lee WK, Roche CJ, Duddalwar VA, et al.: Pseudoaneurysm of the uterine artery after abdominal hysterectomy: Radiologic diagnosis and management. Am J Obstet Gynecol 2001; 185: 1269-72.
- 7) Langer JE, Cope C.: Ultrasonographic diagnosis of uterine artery pseudoaneurysm after hysterectomy. J Ultrasound Med 1999; 18: 711-714.
- 8) Gerardi MA, Díaz-Montes TP.: Late onset hemorrhage caused by ruptured uterine artery pseudoaneurysm after robotic-assisted total hysterectomy. Journal of Robotic Surgery 2011; 5: 295-298.
- 9) Matsubara S.: Pseudoaneurysm: a chameleon in obstetrical emergency practice. Arch Gynecol

- Obstet 2011; 283: 669-670.
- 10) Wu HH, Yeh GP, Hsieh TC.: Iatrogenic uterine rupture caused by overinflation of RUMI manipulator balloon. J minim Invasive Gynecol 2005; 12: 174-176.
 - 11) Sharp HT, et al.: Comparison of the Clear View uterine manipulator with the Cohen cannula in laparoscopy. J Am Assoc Gynecol Laparosc 1995; 2: 207-211.
 - 12) Seki T, Hamada Y, Ichikawa T.: Uterine artery pseudoaneurysm caused by a uterine manipulator. Gynecol Minim Invasive Ther 2017; 6: 25-27.
 - 13) 田中雄大：子宮内膜症に対するハイブリッド ART、日本日エンドメトリオーシス会誌 2016、37、72-76.
 - 14) 産科危機的出血に対するIVR 施行医のためのガイドライン2012 の部分改訂. https://minds.jcqhc.or.jp/docs/minds/Oce/20170518_Guideline.pdf (最終ログイン日2020年12月3日)
 - 15) Wouter J.K., Nicole A., Frank J.M., et al. Loss of ovarian reserve after uterine artery embolization: a randomized comparison with hysterectomy. Human Reproduction 2007; 22: 1996-2005.